



TITLE:

# 異所性陰嚢分離症

AUTHOR(S):

上山, 秀麿; 宮川, 美栄子; 久世, 益治; 堀越, 雄二郎

---

CITATION:

上山, 秀麿 ...[et al]. 異所性陰嚢分離症. 泌尿器科紀要 1972, 18(1): 16-21

ISSUE DATE:

1972-01

URL:

<http://hdl.handle.net/2433/121339>

RIGHT:

## 異 所 性 陰 囊 分 離 症

☆  
京都市立病院泌尿器科（部長：久世益治博士）

上 山 秀 磨

宮 川 美 栄 子

久 世 益 治

京都市立病院 外科（部長：間嶋正徳博士）

堀 越 雄 二 郎

## UNILATERAL TRANSPOSITION OF THE SEPARATED SCROTUM

## — REPORT OF A CASE —

Hidemaro UYAMA, Mieko MIYAKAWA,  
Masuji KUZE and Yūjirō HORIKOSHI\**From the Department of Urology and Surgery\*, Kyoto City Hospital, Japan  
(Chief: Dr. M. Kuze, M.D. and Dr. M. Majima, M.D.)*

A 4-year-old boy, was admitted because of the abnormal scrotum. The right half of the scrotum with its contents was located at the right inguinal region.

This ectopically separated scrotum looked like “prepenial scrotum” or “bifid scrotum” in the previous literatures.

The embryological genesis of this malformation might be considered the same as prepenial scrotum except unilateral occurrence. We suppose that the cause of this ectopic malformation depends upon not only abnormal development of embryonal genital tubercle and urogenital sinus but also some other biological factors.

Up to today, only 4 cases of the ectopic ally separated cases were reported. In Japan our case is the first one.

## 緒 言

著者は最近右陰囊がその内容の睾丸などとともに右そけい部に分離転位している症例を経験，生下時すぐ本科受診したが幼弱のため経過を観察し，4才になって陰囊形成術をおこなったのでここに報告する．文献的に本症と同じと思われる症例は Table 1 の示すごとく，Adair et al. (1960)<sup>1)</sup>，Flanagan et al. (1961)<sup>2)</sup>，Williams (1963)<sup>3)</sup>，Milroy et al. (1969)<sup>4)</sup> の4例をみるにすぎず，本例は著者の蒐集しえた範囲では5例目であり，もちろん本邦ではこの

種の報告はまだみあたらず第1例目である．別に本邦の小川 (1967)<sup>5)</sup> が陰囊分割症の1例として学会報告しているが詳細な記述がなく，本症と同一のものか否か不明である．本症は通常の尿道下裂にみられる陰囊分離とも明らかに異なり，またいわゆるウシにみられた bifid scrotum (1967)<sup>6)</sup> とも考えにくい．発生学的に同様の奇形をもとめるとすれば陰茎前位陰囊<sup>7)</sup> (prepenial or prepenile scrotum) の亜型とも考えられなくはないが，陰茎がはっきりと左陰囊の中後方に位置し，右陰囊のみがその内容とともに右そけい部に存在しているので同一の疾患とはいえない．陰茎前位陰囊症も陰茎の位置

☆ 〒604 京都市中京区壬生東高田町

異常か、陰囊の位置異常なのかどちらをもととして考えるかという点むずかしいことである。もしかりに陰囊をもととして考えた場合、明らかに広義の異所性陰囊 (ectopic scrotum) の概念に含まれることになる。

著者の症例は欧米文献上 ectopic scrotum (Adair 1960<sup>1)</sup> および Milroy 1969<sup>4)</sup>), transposition of scrotum (Flanagan 1961<sup>2)</sup>), anomaly of scrotum and testis (Williams 1963<sup>3)</sup>) とわずか4例の報告しかないにもかかわらず3通りの表現が用いられている。単なる ectopic scrotum のみの表現では、考察の項でものべるが、前述のごとく陰茎前位陰囊症も ectopic scrotum (異所性陰囊) に含まれることになり混乱する。それかといって anomaly of scro-

tum のみでは大きすぎて漠然としている。陰囊は両側融合しているのが正常の形であり、両側陰囊がその内容とともに一カ所に偏位しているなら異所性陰囊という邦訳も正しいが、分離転位している本症の場合は ectopic separated scrotum の意味を含めて、異所性陰囊分離症と表現するのが妥当であると思われる。いずれにしろ外国文献上でも上記3通りの呼び方があり、いずれも正しいとすれば、本邦ではまだ報告されていないので、いかなる邦訳でもよいわけであるが、後人の理解しやすさからいえば異所性陰囊および陰囊奇形よりも形態ならびに位置を表現する目的で異所性 (そけい部または大腿部) 陰囊分離症と呼ぶのがより妥当であるように思われる。

Table 1. 異所性陰囊分離症報告例

	報 告 者	年 代	年 令	臨 床 検 査	その他の奇形合併	治 療	備 考
1	Adair et al.	1960	13 M	WNL	重 複 陰 茎 右 腎 無 形 成	陰 囊 形 成 術	右 そ け い 側 部
2	Flanagan et al.	1961	6 W		右 重 複 腎 盂 左 腎 尿 管 無 形 成 整形外科的合併症		左 恥 骨 上 側 部
3	Williams	1963	4	IVP 正常	口 蓋 破 裂 骨 異 常 兔 唇, 顎 骨 異 常	両側辜丸移動 陰 囊 形 成 術	両 側 性 部 大 腿
4	Milroy et al.	1969	46	IVP 正常		陰 囊 形 成 術	左側そけい部
5	上山 et al.	1971	4	IVP 正常	恥 骨 結 合 離 開 仙 骨 形 成 不 全 位 肛 門 開 口 部 偏 位	陰 囊 形 成 術	右側そけい部

## 症 例

患者：4才，男子。

初診：1967年10月5日。

主訴：外性器の形態異常。

家族歴：父親29才，母親26才の第1子で血族結婚にあらず。

既往歴：とくになし。母親は妊娠中に特別の服薬はせず，発疹および水疱性疾患に罹患したこともない。また放射線に被曝したこともない。満期安産。

現病歴：生下時助産婦に外陰部の異常を指摘され，生後約1カ月目に当科受診したが，幼弱のため形成手術不適當と考え，経過を観察しつつ，4才になってはじめて，形成手術をおこなったが右陰囊が遠くに転位しすぎているため，二次的に形成手術をおこなうこととし，第一次としてまず陰囊の融合術のみをおこなう，陰囊の形の修復はつぎの回におこなうこととし

た。

1971年6月5日入院。

現症：体格・栄養中等度で全身的発育には異常ない。胸腹部，打聴触診上異常を認めず。

外陰部所見：Fig. 1および2に示すごとく，陰茎は年令的にはほぼ正常の大きさに発育し，ごく軽度で無視しうるほどの尿道下裂をみとめるのみ。陰囊は左半分はほぼ正常に位置し，左辜丸等の内容も正常である。陰茎縫線および陰囊縫線は右半分の陰囊が当然あるべき所にないため，左陰囊の右側の辺縁に位置し，そこがちょうど最中央よりの場所となっている。肛門開口部は正中線上になく，1cmほど左側に偏位している。右陰囊は右そけい部に存在し，明らかに陰のう皺襞であり，軽度のそけいヘルニアとそけい部陰囊水腫をみとめる。もし右陰囊が独得の皺襞でなく，いわゆる垂れ下った形でなく，本来の右陰囊部に陰囊縫線を越えて

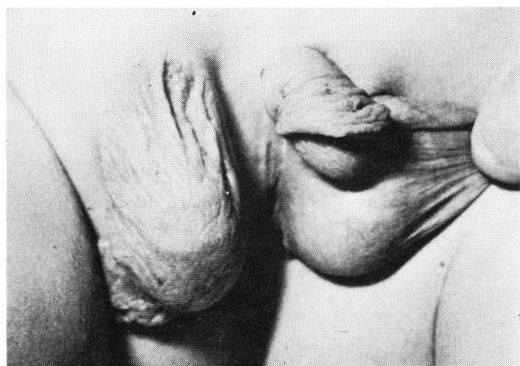


Fig. 1. 術前局所所見

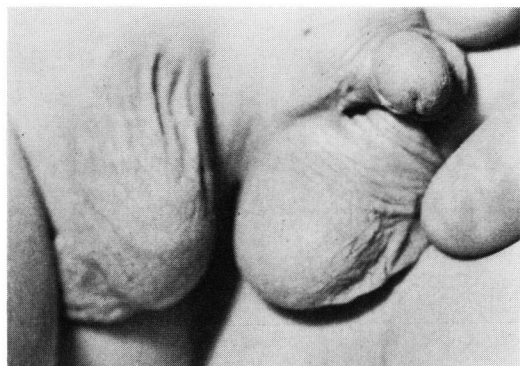


Fig. 2. 術前局所所見

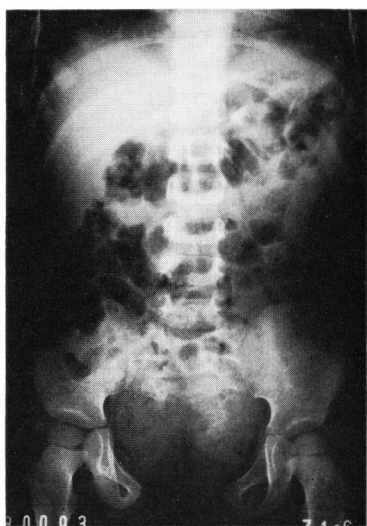


Fig. 3. KUB 恥骨結合離開, 右仙骨形成不全

陰囊がすこしでも存在すれば、ありふれた停留睪丸であるといえるくらい離れた部位に陰囊が右上方変位を示しており、いわゆる陰囊披裂 (bifid scrotum) とは全然異なるものと考えられた。

入院時諸検査成績

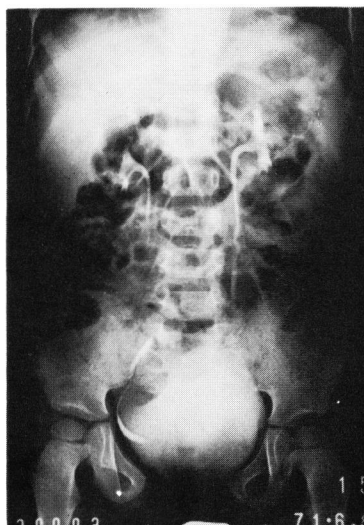


Fig. 4. IVP 正常



Fig. 5. UG 正常

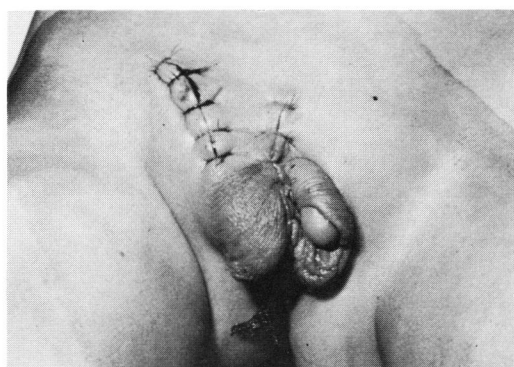


Fig. 6. 術後局所所見

尿所見：外見正常，蛋白（-），糖（-），ウロビリノゲン（-），沈渣異常なし。

血液所見：Ht 34.0%，Hb 11.5 g/dl, RBC  $433 \times 10^4$ , MCHC 34%, MCH 27 rr, MCV  $79 \mu^3$ , 網赤血球数 10‰, 栓球数  $25.6 \times 10^4$ , WBC 4,800, 血液像 好中

球 band. 6%, segment. 26%; リンパ球 小57%, 大2%, 単球5%, 好酸球4%, 血沈1時間平均値4.25 mm, CRP (-), ASLO 12 Todd U., RAT (-), 血液型 A, Rh (+), WaR (-), GOT 19 u, GPT 9 u, アルカリ性フォスファターゼ 19 u, モイレングラハト 3, BUN 11 mg/dl, Na 141.0 mEq/l, K 3.9 mEq/l, Cl 106 mEq/l, Ca 5.2 mEq/l; 蛋白量 6.0 g/dl, 蛋白分画 alb. 70%,  $\alpha_1$  glob. 4%,  $\alpha_2$  9%,  $\beta$  7%,  $\gamma$  10%; 空腹時血糖 131 mg/dl.

その他の検査: 17KS 0.7 mg/day, 17OHCS 2.4 mg/day, sex chromatin 陰性で男性型, 糞便の潜血反応 (-).

#### X線の検査

胸部X線: 正常

腹部単純: 仙骨右半分形成不全, 恥骨結合離開 (Fig. 3).

排泄性腎盂造影: 正常 (Fig. 4).

注腸造影: 奇形なく正常.

尿道膀胱造影: 尿道奇形および憩室をみとめない.

膀胱像はほぼ正常 (Fig. 5).

手術および経過: 1971年6月22日手術. Fig. 1 および 2 に示すごとく右陰囊が左陰囊とあまりにもかけはなれすぎているため, 完全に陰囊の形を一次的に正常に復すことはかえって血流循環障害をきたして不成功に終る懸念があるため, 二次的に形成術をおこな

うこととし, 右そけいヘルニヤ根治手術および右陰囊水腫根治手術をおこない, さらに右陰囊内側方および左陰囊内側方を鞘膜を含めて切開を加え, 右側恥丘上部にも長い皮膚切開を加え Fig. 6 のごとく陰囊融合術をおこなった. 術後陰囊はいちおう一塊とはなったが, W状の形とならざるを得なかった. これは二次的に修正する予定である. 術後排尿異常および歩行障害なく, 1971年7月3日退院した.

## 考 按

Ectopic scrotum (異所性陰囊分離症) は1960年 Adair et al.<sup>1)</sup>の報告を最初として Flanagan et al.<sup>2)</sup>が1961年に transposition of the scrotum (陰囊転位症), Williams (1963)<sup>3)</sup>が anomaly of scrotum and testis (陰囊および睾丸の異常・奇形), Milroy et al. (1969)<sup>4)</sup>がふたたび ectopic scrotum として報告している4例にすぎない. 自験例は前述の Table 1 に示すごとく第5例目に相当する. また本邦では第1例目である. 緒言の項でのべたごとく, 既報告者の呼称をなるべく尊重することにして ectopic separated scrotum の見解をとり邦訳名としては異所性陰囊分離症とした. 本症は Table 2 に示す陰茎前位陰囊症すなわち本邦報告4症例—永田ら (1969)<sup>8)</sup>, 嶋田ら (1967)<sup>9)</sup>, 久保ら (1969)<sup>10)</sup>, 佐々木ら (1970)<sup>11)</sup>—とは発生学的にはともかく異質のものであると考えられる. また単なる bifid scrotum と唱えるには右陰囊が完全に孤

Table 2 本邦既報告陰茎前位陰囊症例

	報 告 者	年 代	年 令	臨 床 検 査	その他の奇形合併	治 療	備 考
1	永 田・ほ か	1966	17	17KS 13.7 mg/d. 17OHCS 6.5 mg/d.	尿 道 下 裂 金 貨 肛	形成手術	
2	嶋 田・ほ か	1967	2			形成手術	
3	久 保・ほ か	1969	16	17KS 3.1 mg/d. 17OHCS 2.9 mg/d.	仙 骨 形 成 不 全 尿 道 の 長 さ 短 小	形成手術	両親血族結婚
4	佐々木・ほ か	1970	10 M	性 染 色 質 (-) X Y . 46	亀 頭 部 尿 道 下 裂	経過観察	

立して右そけい部に転位しているのでいわゆる bifid とはいいいにくい.

停留睾丸と解釈するには確実に右睾丸が右陰囊内に降下しており, そけい部から下垂していることはたしかだがあてはめられない. また尿道下裂のさいにみられる陰囊分裂とも明らかに位置的に差がある.

さて異所性陰囊分離症の発生原因を胎生学的に検討する場合, 必ず比較ならびに参照されるのが陰茎前位陰囊症である. 陰茎前位陰囊症の報告は異所性陰囊分

離症よりはずっと古く, 1911年に Bergman が記載したのが最初といわれ<sup>18)</sup>, それ以後 Francis (1940)<sup>12)</sup>, Huffman (1951)<sup>13)</sup>, Campbell (1951)<sup>14)</sup>, McGuire (1954)<sup>15)</sup>, Gualtieri et al. (1954)<sup>16)</sup>, McIlvoy et al. (1955)<sup>17)</sup>, Forshall et al. (1956)<sup>18)</sup>, Chappell (1958)<sup>19)</sup> の報告があり, 1963年 Campbell<sup>20)</sup> は12例を欧米文献より集録している. 本邦では今回著者が集計したところ Table 2 のごとくわずか4例のみである. Campbell (1963)<sup>20)</sup>はその発生原因について胎生

学的にはっきりとは解明できないが、生殖丘の正常発育に対して性器結節と尿生殖洞の発育が遅れてくることによるのであろうと想像し、Francis (1940)<sup>12)</sup>は尿生殖洞の欠損により、陰茎が後方に移動し、生殖丘が前方に発育したものであろうとし、この生殖器の前方発育は有袋動物では通常であるといっている。Francis の説によると女子の場合でも同様の奇形が起こりうるとされ、高度の骨盤変形もその発生原因となりうるとしている。

上記 Campbell<sup>20)</sup> および Francis<sup>12)</sup>の説を著者の異所性陰囊分離症にあてはめるとすれば、尿生殖洞と生殖丘の発育の時期のずれが片側のみに起こったと考えられないこともないが、胎生発育が中央線を中心に始まることおよび著者の例では陰茎があくまでも正常位置に存在することならびに転位がつよすぎるなどとはそれと矛盾する。しかし陰茎前位陰囊症には高い頻度で他種の奇形合併をみるとされ、下部腸管の異常、骨格の異常、上部尿路の奇形、尿道欠損があげられており、著者例では注腸造影では下部腸管の異常はなかったが、肛門開口部がやや左に偏位しており、仙骨右半分形成不全、恥骨結合離開等の奇形を合併しており、奇形合併の点からは陰茎前位陰囊症の永田ら<sup>8)</sup>、久保ら<sup>10)</sup>にみられた合併症とはなはだ似ている。

しかし異所性陰囊分離症の奇形合併症もかなり多く、Table 1にみられるごとく、重複陰茎、片腎無形成、整形外科的合併症、口蓋破裂、兔唇などがいわれている。

以上発生学的検討を陰茎前位陰囊症の文献を集めて類推したが、異所性陰囊分離症の報告からまとめてみると、前者の検討をおこなってのち胎生学的考察をおこなっているのが多い。Adair (1960)<sup>1)</sup>は、前述の陰茎前位陰囊症の発生説を著者と同様応用しているが完全な説明は同じく不能であるとしている。すなわち位置的に前後関係は理解できるが側方のずれがわからないとしている。また、かれの症例における重複陰茎に関しては Nesbit et al. (1933)<sup>21)</sup>の説に同意している。また Flanagan et al. (1961)<sup>2)</sup> および Milroy (1969)<sup>3)</sup>は陰囊の胎生学的発育を Spalding (1921)<sup>22)</sup>の説にもとめ、尿生殖洞と性器結節の両者が発育途中膨隆してくるときの上下の位置異常および時期のずれによることはたしかだが、片側性ということはやはり理解できないとし、何か他の動物細胞分裂学的変化に因するのではなからうかと想像している。著者も本症例において数多くの奇形の合併をとまなうことから単に尿生殖洞や性器結節の発育異常のみに原因をもとめるのではなく、全身的に奇形をきたす機構またはなんら

かの因子がその動物生体個々に発生したのではないかと想像するとともに、さらに本症が1960年より以前には報告されなくて最近10年間に5例も報告されているのは医学的進歩によって受診頻度がたかくなったために増えたのかもしれないが、そのみでなく社会文明の発達とともに、より多くの種々の負担が母体にかかり奇形発生頻度が高くなりつつあるのかもしれない。

本症の治療であるが、陰茎前位陰囊症に対する Campbell (1951)<sup>14)</sup>、(1963)<sup>20)</sup>、McIlvoy et al. (1955)<sup>17)</sup>、Forshall et al. (1956)<sup>18)</sup>、また異所性陰囊分離症に対する Adair et al. (1960)<sup>1)</sup>、Williams et al. (1963)<sup>2)</sup>、Milroy et al.<sup>3)</sup>と同様、個々の陰囊の側面切開により形成術をおこなうべきである。

## 結 語

1) 生下時より観察した4才の異所性陰囊分離症に対して形成手術をおこない成功したので報告した。

2) 異所性陰囊分離症は文献上第5例目で、本邦では第1例目である。疾患名として異所性陰囊という表現では陰囊が異所にあることはわかるが、2分して存在する感じが得られないことと、陰茎前位陰囊症も広義の異所性陰囊の中にはいり混乱すると思われるので異所性陰囊分離症とした。さらにその部位によって、異所性そけい部陰囊分離症とも、異所性大腿部陰囊分離症とも表現が可能である。

3) その発生機構として陰茎前位陰囊症でいわれている性器結節と尿生殖洞の発育異常のみに因を求めることはできなく、胎生期の他の生体部分の細胞分裂の過程に原因があるのではなからうかと想像した。

本論文の要旨は1971年9月11日に大阪大学でおこなわれた日本泌尿器科学会関西地方会において著者の1人久世が報告した。そのさい同様生後4カ月の症例を大阪大学奥山らが報告したことを付記する。

## 参 考 文 献

- 1) Adair, E. L. and Lewis, E. L. : Ectopic scrotum and diphallia : Report of a case, J. Urol., 84 : 115~117, 1960.
- 2) Flanagan, M. J., McDonald, J. H. and Kiefer, J. H. : Unilateral transposition of the scrotum, J. Urol., 86 : 273~275, 1961.
- 3) Williams, D. W. : Anomaly of scrotum and

- testis. Simple plastic repair, *J. Urol.*, **89**: 860~863, 1963.
- 4) Milroy, E.: Ectopic scrotum. A review of the literature and report of a further case, *Brit. J. Urol.*, **41**: 235~237, 1969.
- 5) 小川正見・松永重昂・長久保一朗・新村研二：陰囊分割症例，*日泌尿会誌*，**58**：758，1967.
- 6) Kohli, I. S. and Rajwanshi, D. S.: A case of bifid scrotum in a buffalo-bull, *Indian Veterinary Journal*, **44**: 256, 1967.
- 7) 井上彦八郎：陰茎前位陰囊，*日泌全書*，**6**：196, 1960.
- 8) 永田正夫・本田 著・有近 享・鈴木良徳：陰茎前位陰囊症例，*日泌尿会誌*，**57**：305~308, 1966.
- 9) 嶋田考宏：陰茎前位陰囊症例，*日泌尿会誌*，**58**：436, 1967 (学会発表).
- 10) 久保 隆・小野寺豊：Transposition of the penis and scrotum の手術経験，*日泌尿会誌*，**60**：471, 1969 (学会発表).
- 11) 佐々木圭一・松下鉦三郎・一条貞敏・竹内睦男・白井将文：陰茎前位陰囊症の1例，*日泌尿会誌*，**61**：414, 1970 (学会発表).
- 12) Francis, C. C.: A case of prepenial scrotum (marsupial type of genitalia) associated with absence of urinary system, *Anat. Rec.*, **76**: 303~308, 1940.
- 13) Huffman, L. F.: A case of prepenile scrotum, *J. Urol.*, **65**: 141~143, 1951.
- 14) Campbell, M. F.: *Clinical Pediatric Urology* p. 274, Philadelphia, W. B. Saunders Co., 1951.
- 15) McGuire, N. G.: Prepenile scrotum, *Brit. J. Surg.*, **42**: 203~205, 1954.
- 16) Gualtieri, T. and Segal, A. D.: Prepenile scrotum in a double monster teratological considerations. The hazard of radiation, *J. Urol.*, **71**: 488~496, 1954.
- 17) McIlvoy, D. B. and Harris, H. H.: Transposition of the penis and scrotum: Case report, **73**: 540~543, 1955.
- 18) Forshall, I. and Rickham, P. P.: *Brit. J. Urol.*, **28**: 250~252, 1956.
- 19) Chappel, B. S.: Transposition of external genitalia in a case with Fanconi type deformity, *J. Urol.*, **79**: 115~118, 1958.
- 20) Campbell, M. F.: *Urology* **II**, 1517, W. B. Saunders Co. 1964.
- 21) Nesbit, R. M. and Bromme, W.: Double penis and double bladder, *Am. J. Roentgenol.*, **30**: 497, 1933.
- 22) Spalding, M. H.: The development of the external genitalia in the human embryo, *Contributions to Embryology*, **61**: 67~88, 1921.

(1971年9月17日受付)